## Caso Clínico

# Abordagem cirúrgica conservadora de fibroma ossificante em localização atípica da mandíbula: relato de caso

Conservative surgical approach of ossifying fibroma in atypical location of the jaw: case report

> Larissa Oliveira Ramos Silva\* Paula Rizerio D'Andrea Espinheira\* Tagna de Oliveira Brandão\*\* André Victor Pinto Serra\* Joaquim Almeida Dultra\*\*\* Ieda Margarida Crusoé Rocha Rebello\*\*\*\*

#### Resumo

O fibroma ossificante (FO) é uma neoplasia fibro-óssea benigna da região craniofacial de origem odontogênica, formado a partir de células mesenquimais multipotentes do ligamento periodontal, as quais são capazes de formar osso, tecido fibroso e cemento. Acredita-se que exodontias prévias, infecções, trauma ou uma perturbação de origem congênita na maturação óssea poderiam servir como fatores predisponentes para o desenvolvimento do FO. Radiograficamente, as lesões de FO iniciais são representadas por uma imagem radiolúcida, unilocular, redonda ou oval, de margem bem circunscrita. No estágio tardio, o componente mineralizado é circundado por uma fina cápsula fibrosa representada por uma linha radiolúcida delgada, que envolve toda a lesão. O objetivo deste trabalho é discutir a abordagem cirúrgica de um FO localizado em região atípica da mandíbula. Relato de caso: paciente leucoderma, 18 anos de idade, sexo feminino, cursando com aumento de volume em região posterior mandibular direita. No exame de imagem, identificou-se uma lesão mista, bem definida, não corticalizada, medindo aproximadamente 3 cm x 2,5 cm. Após realização de biópsia incisional, confirmou-se o diagnóstico de FO. Sendo assim, optou-se pela curetagem acompanhada de uma osteotomia periférica da lesão e reabilitação da região com enxerto ósseo liofilizado, além da instalação de uma placa de reconstrução na base da mandíbula do sistema 2.4 mm. Considerações finais: É necessário ter conhecimento sobre as lesões de aspecto radiográfico misto, que podem fazer diagnóstico diferencial com o FO, para que possa ser realizada uma correta intervenção, visto que para cada lesão há uma abordagem diferente.

Palavras-chaves: Fibroma ossificante. Doenças do desenvolvimento ósseo. Cirurgia bucal.

http://dx.doi.org/10.5335/rfo.v25i2.10899

Cirurgiã(ão) Bucomaxilofacial pela Universidade Federal da Bahia.

Residente em Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial da Universidade Federal da Bahia.
Doutor em Odontologia pela Universidade Federal da Bahia.

<sup>\*\*\*\*</sup> Professora, Departamento de Radiologia Oral e Maxilofacial, Universidade Federal da Bahia, Faculdade de Odontologia, Salvador, BA, Brasil.

## Introdução

O fibroma ossificante (FO) é uma neoplasia fibro-óssea benigna da região craniofacial de origem odontogênica, formado a partir de células mesenquimais multipotentes do ligamento periodontal, as quais são capazes de formar osso, tecido fibroso e cemento<sup>1,2</sup>. Acredita-se que exodontias prévias, infecções, trauma ou uma perturbação de origem congênita na maturação óssea poderiam servir como fatores predisponentes para o desenvolvimento do FO<sup>2,3</sup>.

Possui predileção por indivíduos de ascendência caucasiana, preferencialmente do sexo feminino, apresentando maior incidência entre a terceira e a quarta décadas de vida<sup>1,2,4,5</sup>. Ocorre predominantemente em mandíbula, localizando-se mais comumente na região pré-molar e molar<sup>1,2</sup>. Estas lesões exibem capacidade proliferativa progressiva, porém são de crescimento lento e assintomático, de modo que, se não tratadas, podem ocasionar assimetrias que levam a deformidades faciais e problemas funcionais significativos, incluindo mobilidade e deslocamentos dentários, dor e parestesia<sup>2,3,5</sup>.

Radiograficamente, as lesões iniciais são representadas por uma imagem radiolúcida, unilocular, redonda ou oval, de margem bem circunscrita<sup>1-3</sup>. À medida que o tumor se desenvolve, observa-se uma mineralização progressiva de sua matriz, de modo que a lesão assume uma densidade mista, com um aspecto multilocular, variando o seu padrão de acordo com a quantidade do material calcificado presente em seu interior<sup>2-5</sup>. No estágio tardio, o componente mineralizado é circundado por uma fina cápsula fibrosa representada por uma linha radiolúcida delgada que envolve toda a lesão<sup>1,4,5</sup>.

Nesse sentido, o FO faz diagnóstico diferencial com lesões que apresentam diferentes graus de opacidade, incluindo principalmente o tumor odontogênico epitelial calcificante, tumor odontogênico adenomatoide, ameloblastoma, granuloma central de células gigantes e o cisto odontogênico calcificante<sup>2,6</sup>. Apesar de o diagnóstico definitivo do FO ser feito através de exame histopatológico, análise cuidadosa deve ser feita por conta da similaridade microscópica com a Displasia

Fibrosa (DF). Entretanto, cirurgicamente, estas lesões apresentam características distintas. O FO apresenta-se como uma lesão bem delimitada, encapsulada e, portanto, de fácil dissociação do osso, enquanto a DF consiste em uma massa arenosa, fragmentada, hemorrágica e de difícil remoção<sup>2,3,7</sup>.

Essa característica do FO permite a realização de um tratamento conservador, por enucleação ou curetagem do tumor<sup>1,2</sup>. Entretanto, essa alternativa é indicada para lesões de pequena dimensão, sendo que, no caso de lesões extensas, opta-se pela ressecção cirúrgica radical<sup>1,2,4,5</sup>. Desse modo, é necessário que seja realizada uma cirurgia de reconstrução com enxerto ósseo e implantes ou, ainda, placas de titânio, a fim de superar os problemas estéticos e funcionais após a remoção da lesão<sup>1,2</sup>.

O objetivo deste trabalho é discutir a abordagem cirúrgica de um FO localizado em região atípica da mandíbula.

#### Relato de caso

Paciente leucoderma, 18 anos de idade, sexo feminino, procurou o Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital Santo Antônio - Obras Sociais Irmã Dulce, Salvador, BA, após a realização de um exame de imagem com indicação ortodôntica (Figura 1). No exame clínico, notou-se discreto aumento de volume em região posterior de mandíbula, porém sem alterações na oclusão do paciente. No exame de imagem, identificou-se uma lesão mista, bem definida, porém não corticalizada, medindo aproximadamente 3 cm x 2,5 cm, em região goníaca e inferior do ramo mandibular direito, com hipótese diagnóstica de FO ou granuloma central de células gigantes (Figuras 1 e 2). A paciente foi submetida a uma biópsia incisional e as peças cirúrgicas foram enviadas para avaliação histopatológica, confirmando-se o diagnóstico de FO.

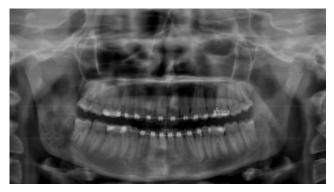


Figura 1 – Radiografia panorâmica pré-operatória demonstrando lesão mista em ramo mandibular direito

Fonte: autores.



Figura 2 – Perfil direito de reconstrução tomográfica em 3D da lesão

Fonte: autores.

A cirurgia foi virtualmente planejada e simulada em biomodelo impresso da mandíbula confeccionado através da tomografia computadorizada em cortes de 1,0 mm (Figura 3). Sendo assim, foi realizada uma incisão do tipo Risdon estendida em mandíbula para exposição da lesão e execução do tratamento de escolha, em que se optou pela curetagem acompanhada de uma osteotomia periférica da lesão (Figura 4) e reabilitação da região com enxerto ósseo bovino liofilizado (Geistlich Bio-Oss®), tendo como arcabouço uma tela de titânio do sistema 1.5 mm, além da instalação de uma placa de reconstrução na base da mandíbula do sistema 2.4 mm, previamente modelados no biomodelo de forma a adaptar-se e reconstituir o perfil da mandíbula a ser excisada (Figuras 5 e 6).



Figura 3 – Biomodelo impresso a partir da tomografia computadorizada com a tela de titânio e a placa de reconstrução devidamente ajustadas à anatomia da mandíbula

Fonte: autores.



Figura 4 – Aspecto clínico da loja cirúrgica após curetagem e instalação de placa de reconstrução

Fonte: autores



Figura 5 – Aspecto final após aposição de enxerto e instalação de tela de titânio

Fonte: autores.



Figura 6 – Radiografia panorâmica em pós-operatório de um mês exibindo sobreposição da tela e placa com as estruturas ósseas de margens regulares

Fonte: autores.

Após 2 anos de acompanhamento, observouse um crescimento ósseo efetivo no local da lesão (Figura 7), indicando o sucesso do tratamento, de modo que foi sugerida a remoção do sistema de fixação interna rígida, que, por decisão da paciente, foi mantida.

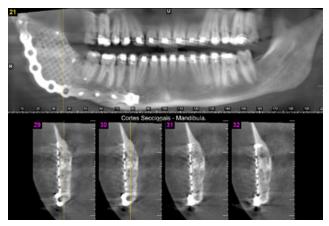


Figura 7 – Tomografia computadoriza de feixe cônico após 2 anos de intervenção cirúrgica e reconstrução panorâmica da face e coronais do ramo mandibular direito exibindo importante formação óssea na região de aspecto dentro da normalidade

Fonte: autores

## Discussão

O FO é considerado a lesão fibro-óssea benigna mais comum da região bucomaxilofacial<sup>6,8</sup>. O perfil da paciente é condizente com a literatura, no entanto, sua localização representa uma região de acometimento atípico<sup>6,8,9</sup>. Nesse sentido, Su et al.<sup>9</sup> (1997) avaliaram a ocorrência da lesão em diferentes segmentos de maxila e mandíbula e observaram que o ângulo e o ramo mandibulares são as áreas menos acometidas pelo FO, representando 4% da totalidade dos casos analisados $^9$ .

Sabe-se que a aparência radiográfica do FO varia dependendo do estágio de desenvolvimento. Nesse sentido, evidências demonstram que a maioria das lesões apresentam um aspecto radiográfico misto, com margens bem definidas, as quais são facilmente distinguíveis do osso circundante<sup>6,8,9</sup>. Além disso, Titinchi e Morkel<sup>8</sup> (2016) identificaram que lesões de densidade mista foram predominantes em pacientes mais jovens, de faixa etária entre 10 e 30 anos, enquanto pacientes com idade acima de 40 anos apresentavam mais comumente lesões radiopacas<sup>8</sup>.

Esse aspecto radiográfico pode ser confundido com uma série de lesões, as quais compartilham características semelhantes<sup>6,10</sup>. No nosso caso, o granuloma central de células gigantes foi eleito como uma das hipóteses de diagnóstico pelo radiologista, entretanto, esta pode ser diferenciada por apresentar halo radiopaco e provocar reabsorção dentária, fato que dificilmente é visto no FO<sup>11-13</sup>. Sendo assim, o exame histopatológico é crucial para confirmar a natureza da lesão e direcionar o tratamento<sup>14</sup>. Com as informações tomográficas, a decisão por abordagem conservadora, planejamento virtual e modelagem da tela e placa foi conseguida com acurácia.

Nesse sentido, a excisão cirúrgica conservadora, compreendendo enucleação e/ou curetagem, constitui-se o método de tratamento de preferência por ser uma opção versátil e menos debilitante ao paciente, entretanto, é possível que permaneçam resíduos de tecido tumoral, o que pode aumentar as chances de recorrência da lesão 10,14,15. Por esse motivo, procedimentos cirúrgicos agressivos, incluindo ressecção parcial ou em bloco da mandíbula, geralmente, são usados como uma estratégia para evitar recidivas, sendo indicado no tratamento de lesões maiores, em que é identificada a existência de alguma disfunção como resultado do tamanho do tumor, ainda, nos casos em que há o envolvimento da borda inferior da mandíbula ou grande aproximação a ela, e quando a lesão apresenta margens difusas e mal defi $nidas^{10,13-17}$ 

Um estudo feito por Triantafillidou *et al.*<sup>17</sup> (2012) mostrou resultados bem sucedidos de le-

sões tratadas com procedimentos conservadores que apresentavam margens bem delineadas e com expansão óssea oval ou esférica. Sendo assim, levando em consideração a evolução clínica do caso, julgou-se apropriada a realização de um protocolo conservador, optando-se pela curetagem da lesão até atingir margens ósseas saudáveis, seguida de uma osteotomia periférica, sabendo que a curetagem simples deve ser evitada, justamente pelo risco de doença residual e futuras recidivas<sup>18</sup>. Adicionalmente, a escolha dessa técnica baseou-se nas diferentes recomendações de cada procedimento, de modo que, enquanto a enucleação é sugerida para lesões semelhantes a cistos, radiolucentes, uniloculares e encapsuladas, a curetagem, além de ser um procedimento satisfatório e amplamente utilizado no tratamento do FO, é indicada em casos de lesões mistas, em que, na exploração cirúrgica, o osso circundante se fundiu em torno da patologia, correspondendo com esse relato<sup>8,10,16</sup>.

Existem diferentes opções de enxertos de reposição óssea disponíveis e alguns fatores são determinantes na escolha do biomaterial a ser utilizado, incluindo: dimensão do defeito ósseo, quantidade de paredes envolvidas, restauração do volume adequado e reparo rápido versus tardio 19,20. Nesse sentido, o osso autógeno ainda é o material ideal para enxertia, porém o acesso a uma quantidade limitada de material e a morbidade associada à sua coleta são uns dos motivos pelos quais se buscou alternativas de biomateriais para utilização na prática diária, dentre eles o xenoenxerto, que são materiais retirados de outras espécies<sup>20,21</sup>. O exemplo mais comum empregado na Odontologia é o enxerto ósseo bovino liofilizado, também conhecido como osso inorgânico, devido ao seu método de processamento e purificação, em que todas as células e o material proteico são removidos, permanecendo apenas um arcabouço ósseo mineralizado e reabsorvível<sup>19</sup>. Sendo assim, além de ser biocompatível, o xenoenxerto caracteriza-se por apresentar potencial osteocondutor, servindo de arcabouço para a migração de osteoblastos e formação óssea em sua superfície, além de possuir excelente osteointegração, incorporando-se de maneira estável ao osso circundante<sup>21</sup>. Essas características justificam o sucesso do tratamento exposto nesse caso clínico.

Com o objetivo de possibilitar a percepção tátil da patologia estudada, foi confeccionado um biomodelo da mandíbula da paciente, o que permitiu um planejamento cirúrgico preciso e satisfatório. Esses modelos são utilizados no período pré-operatório, quando é realizada uma simulação do procedimento cirúrgico, possibilitando as demarcações prévias dos traçados das osteotomias, adaptação e pré-modelagem de placas de reconstrução, além da avaliação dos defeitos ósseos para enxertia, antecipando o tamanho, a forma e a característica do enxerto ósseo necessário para a reabilitação. Isso implica na diminuição do tempo cirúrgico, melhorando a previsibilidade do tratamento, condições traumáticas ou patoló $gicas^{22,23}$ .

#### Conclusão

Diante do exposto, é necessário ter conhecimento sobre as lesões de aspecto radiográfico misto, que podem fazer diagnóstico diferencial com o FO, para que possa ser realizada uma correta intervenção, visto que para cada lesão há uma abordagem diferente. Ademais, um planejamento cirúrgico minucioso com a utilização de biomodelos é essencial na escolha adequada do tratamento, podendo oferecer resultados mais previsíveis e precisos. Os pacientes devem ser acompanhados por longo prazo, para que sejam diagnosticadas possíveis recidivas, pois, embora haja uma baixa taxa de recorrência, elas podem se desenvolver até dez anos após o tratamento.

## **Abstract**

The ossifying fibroma (FO) is a benign fibro-osseous neoplasm of the craniofacial region of odontogenic origin, formed from multipotent mesenchymal cells of the periodontal ligament, which are capable of forming bone, fibrous tissue and cementum. It is believed that previous exodontia, infections, trauma or a disturbance of congenital origin in bone maturation could serve as predisposing factors for FO development. Radiographically, the initial FO lesions are represented by a radiolucent, unilocular, round or oval image with well circumscribed margin. In the late stage, the

mineralized component is surrounded by a thin fibrous capsule represented by a thin radiolucent line, which surrounds the entire lesion. The objective of this work is to discuss the surgical approach of a FO located in the atypical region of the mandible. Case report: leucoderma patient, 18 years, female, it were possible to note a slight volume increase in the posterior mandible region. The imaging examination identified a mixed lesion, well defined, however non-corticalised, measuring about 3 cm x 2.5 cm. The patient was submitted to an incisional biopsy and the diagnosis of ossifying fibroma was confirmed. We opted for a curettage followed by a peripheral osteotomy of the lesion and rehabilitation of the region with lyophilized bovine bone graft, besides the installation of a rebuilding plate at the base of the mandible system 2.4mm. Final considerations: it is necessary to have knowledge about lesions of mixed radiographic appearance, which can make differential diagnosis with FO so that a correct intervention can be performed, since for each lesion we have a different approach.

*Keywords*: Ossifying fibroma. Developmental bone diseases. Oral surgery.

### Referências

- Lopes MCA, Barros SSLV, Lima CCB, Nogueira LBLV, Rocha MMF, Moraes SS. Fibroma ossificante na mandíbula: relato de caso de patologia rara. Rev Cir Traumatol 2013; 13(1):77-82.
- Silveira DT, Cardoso FO, Silva BJA, Cardoso CAA, Manzi FR. Fibroma ossificante: relato de caso clínico, diagnóstico imaginológico e histopatológico e tratamento feito. Rev Bras Ortop 2016; 51(1):100-4.
- 3. Akashi M, Matsuo K, Shigeoka M, Kakei Y, Hasegawa T, Tachibana A, *et al.* A case series of fibro-osseous lesions of the jaws. Kobe J Med Sci 2017; 63(3):E73-9.
- Ahmad M, Gaalaas L. Fibro-Osseous and Other Lesions of Bone in the Jaws. Radiol Clin North Am 2018; 56(1):91-104.
- Baumhoer D. Bone-Related Lesions of the Jaws. Surg Pathol Clin 2017; 10(3):693-704.
- Chang CC, Hung HY, Chang JYF, Yu CH, Wang YP, Liu BY, et al. Central Ossifying Fibroma: A Clinicopathologic Study of 28 Cases. J Formos Med Assoc 2008; 107(4):288-94.
- Wang T, Zhang R, Wang L, Chen Y, Dong Q, Li T. Two cases of multiple ossifying fibromas in the jaws. Diagn Pathol 2014; 9(1):1-10.
- Titinchi F, Morkel J. Ossifying Fibroma: Analysis of Treatment Methods and Recurrence Patterns. J Oral Maxillofac Surg 2016; 74(12):2409-19.
- Su L, Weathers DR, Waldron CA. Distinguishing features of focal cemento-osseous dysplasia and cemento-ossifying fibromas. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1997; 84(5):540-9.
- Dominguete MHL, Dominguette AAS, Matos BH, Dominguete PR, León JE, Oliveira LR. Extensive Presentation of Central Ossifying Fibroma Treated with Conservative Surgical Excision. Case Rep Dent 2014; 2014(2):1-4.

- Noleto JW, Marchiori E, Sampaio RK, Irion KL, Collares FB. Aspectos radiológicos e epidemiológicos do Granuloma Central de Células Gigantes. Radiol Bras 2007; 40(4):167-71.
- 12. Katti G, Khan MM, Chaubey SS, Amena M. Cemento-ossifying fibroma of the jaw. BMJ Case Rep 2016 May 12;2.
- Lv M, Shen Y, Li J, Gvetadze SR, Sun J. Which Patients With Ossifying Fibroma of the Jaws Would Be Suitable for Radical Ablative Surgery. J Craniofac Surg 2016; 27(4):927-31.
- 14. Suarez AS, Hermosa MRR, Minguez IM, Floria LG, Barea JG, Delhom JV. Management of fibro-osseous lesions of the cranio-facial area. Presentation of 19 cases and review of the literature. Med Oral Patol Oral y Cir Bucal 2013; 18(3):e479-85.
- Liu Y, Shan X, Guo X, Xie S, Cai Z. Clinicopathological Characteristics and Prognosis of Ossifying Fibroma in the Jaws of Children: A Retrospective Study. J Cancer 2017; 8(17):3592-7.
- Mohanty S, Gupta S, Kumar P, Sriram K, Gulati U. Retrospective Analysis of Ossifying Fibroma of Jaw Bones Over a Period of 10 Years with Literature Review. J Maxillofac Oral Surg 2014; 13(4):560-7.
- Triantafillidou K, Venetis G, Karakinaris G, Iordanidis F. Ossifying fibroma of the jaws: a clinical study of 14 cases and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 2012; 114(2):193-9.
- Kumar KAJ, Kishore PK, Mohan AP, Venkatesh V, Kumar BP, Gandla D. Management and Treatment Outcomes of Maxillofacial Fibro-osseous Lesions: A Retrospective Study. J Maxillofac Oral Surg 2015; 14(3):728-34.
- Hanes PJ. Bone Replacement Grafts for the Treatment of Periodontal Intrabony Defects. Oral Maxillofac Surg Clin North Am 2007; 19(4):499-512.
- 20. Pinto JGS, Ciprandi MTO, Aguiar RC, Lima PVP, Hernandez PAG, Júnior ANS. Enxerto autógeno x biomateriais no tratamento de fraturas e deformidades faciais uma revisão de conceitos atuais. RFO 2007; 12(3):79-84.
- Precheur H V. Bone Graft Materials. Dent Clin North Am 2007; 51(3):729-46.
- Cunningham LL, Madsen MJ, Peterson G. Stereolithographic Modeling Technology Applied to Tumor Resection. J Oral Maxillofac Surg 2005; 63(6):873-8.
- Mehra P, Miner J, D'Innocenzo R, Nadershah M. Use of 3-D Stereolithographic Models in Oral and Maxillofacial Surgery. J Maxillofac Oral Surg 2011; 10(1):6-13.

#### Endereço para correspondência:

Larissa Oliveira Ramos Silva Rua João José Rescalada, 62, Imbui, Condominio Moradas do Ímbuí, Edifício Indaiá, Apto 301 CEP 41720-130 – Salvador, BA, Brasil Telefone: (75) 991808833 E-mail: larissaramost@hotmail.com

Recebido: 26/04/2020. Aceito: 02/03/2021.